

부신에 발생한 내피성 낭종 1예

연세대학교 의과대학 내과학교실

전태주 · 신장열 · 이유미 · 김세화 · 박희백
안철우 · 차봉수 · 김경래 · 이현철 · 허갑범 · 임승길

=Abstract=

A case of endothelial cyst of the adrenal gland

Tae Joo Jeon, M.D., Jang Yul Shin, M.D., Yumie Rhee, M.D.,
Sewha Kim, M.D., Hee Bhak Park, M.D., Chul Woo Ahn, M.D.,
Bong Soo Cha, M.D., Kyung Rae Kim, M.D., Hyun Chul Lee, M.D.,
Kap Bum Huh, M.D. and Sung Kil Lim, M.D.

*Department of Internal Medicine,
Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea*

Adrenal cysts are rare lesions usually discovered incidentally during surgery, or at the time of autopsy. Most adrenal cysts are generally asymptomatic and small, less than 10 cm in diameter. When adrenal cysts enlarge sufficiently, they cause pain and gastrointestinal disturbances or become palpable. When cystic lesions in upper abdomen are found, many cystic lesions such as hepatic, splenic, renal and pancreatic cysts should be considered. It's difficult to differentiate between benign and malignant lesions. Usually these cystic lesions have been excised to rule out malignancy. Herein we report a case of adrenal endothelial cyst which was detected in a 63-year-old female patient during a routine health examination by ultrasonography. (Korean J Med 62:680-684, 2002)

Key Words : Adrenal cyst, Endothelial cyst

서 론

부신에 생긴 낭종은 아주 드문 경우로 대개 발생율을 0.06%에서 0.18%로 보고하고 있다⁷⁾. 대개 조직학적으로 양성으로 크기가 커질 때까지 대개 무증상이며 통증, 소화불량, 중앙 촉진 등의 증상을 보일 수 있고, 낭내 출혈이나 파열이 생기면 급성 복통을 호소할 수도 있다. 수술이나 부검 중에 우연히 발견되는 경우가 대부분이나 최근 방사선적 진단 기술의 발달로 진단율이 점점 증

가하는 추세이다. 모든 연령에 다 생길 수 있으나 대개 20대에서 40대에서 호발하며 여성 대 남성의 비율은 2:1에서 3:1 정도로 여성에서 많이 생긴다^{7, 13)}. 대개 일측성으로 오며 좌,우 발생빈도에는 차이가 없다. 크기가 큰 부신 낭종의 경우 부신과 인접한 비장, 간, 신장, 후복막 내의 낭종과 감별이 필요하다. 치료는 낭종의 크기와 증상에 의해 결정되며 보통 크기가 작고 무증상의 경우, 대개 낭종이 양성이므로 수술적 치료가 필요하지 않는다. 그러나 증상을 초래할 정도로 그 크기가 크거나

• 접수 : 2001년 2월 21일

• 통과 : 2002년 1월 12일

• 교신저자 : 임승길, 서울시 서대문구 신촌동 134, 연세대학교 의과대학 내과학교실 (120-752)

E-mail : lsk@yumc.yonsei.ac.kr

합병증을 동반하는 경우 수술적 절제가 필요하다. 또한 기생충성낭이나 기능성낭종, 악성낭종의 경우에도 수술적 치료가 필요하다¹³⁾. 경피를 통한 흡인이나 배액은 초기 부신 낭종을 치료하는데 있어서 선택할만한 방법이 아니나 시행 후 낭종의 조직형을 알기가 힘들고 드물게는 악성 종양을 놓칠 수 있는 단점이 있다⁷⁾. 한 연구에서는 흡인한 환자의 50%에서 낭종 내 체액이 다시 생긴다고 한다¹⁹⁾. 저자는 건강 검진상 복부 초음파 검사로 우연히 발견하여, 당시 췌장 낭종으로 오인한 63세 여자의 좌측

부신에서 발생한 12×11 cm 크기의 내피성 낭종 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

상기 63세 여자환자는 최근 전신 쇠약감, 체중 감소 및 복부 통증이 있어 건강 검진을 시행받은 결과 당뇨, 갑상선 항진증 소견 보였으며, 이 때 시행한 복부 초음파 검사 상 왼쪽 중복부에 약 10 cm 이상의 큰 낭성 종양이 관찰되어 본원에 입원하였다 (그림 1). 입원 후 시행한 복부 전산화 단층 촬영상 췌장 미부, 췌장 뒤쪽으로 12×11 cm 크기의 얇은 벽을 가진 낭성 종양이 관찰

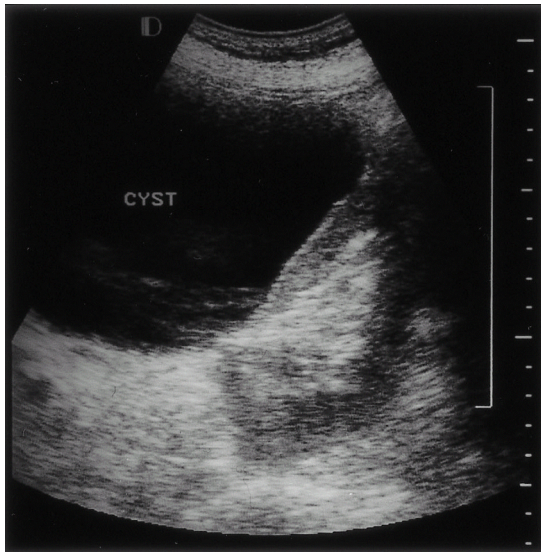


Figure 1. Abdominal ultrasonography shows huge cystic mass in left mid-abdomen.

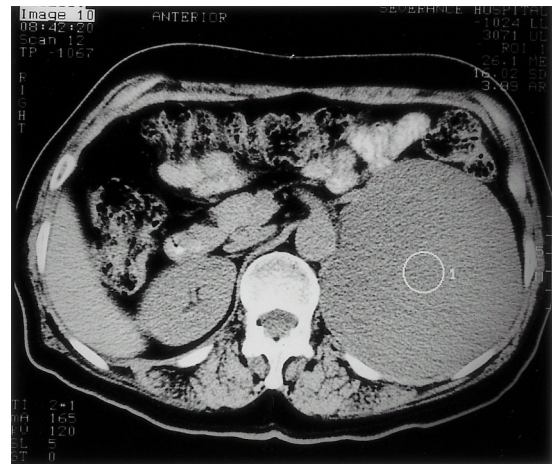


Figure 2. Abdominal CT shows well-defined cystic mass near pancreatic tail.

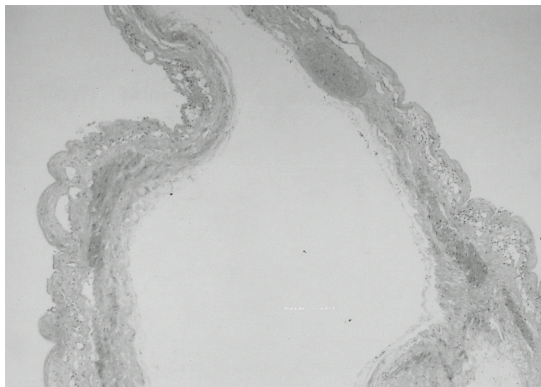


Figure 3A

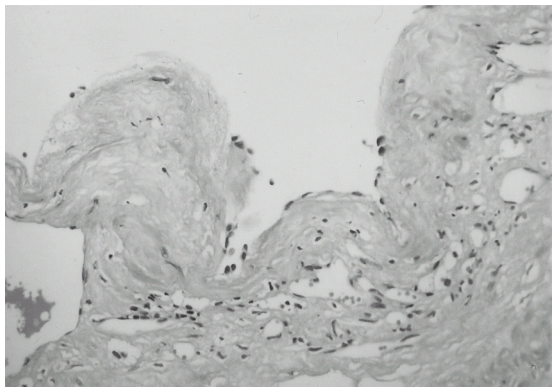


Figure 3B

Figure 3. (A) Photomicrograph shows about 12 cm sized adrenal cyst (H&E stain ×100). (B) Inner surface of cyst is lined with flattened cells. It looks like endothelial cells (H & E stain ×400).

되었다. 이 낭성 종양은 췌장의 많은 부분과 접하고 있으며, 췌장의 미부를 앞쪽으로 밀고 있고, 비장, 신장, 부신을 밀어내고 있었다 (그림 2).

혈액검사상 공복시 혈당 169 mg/dL, fT4 5.4 ng/dL (0.73~1.95 ng/dL), TSH<0.017 IU/mL (0.34~3.5 IU/mL)로 당뇨, 갑상선 기능 항진증 소견 보였으며, 오전 8시 채혈한 ACTH와 cortisol은 각각 53.04 pg/mL (4.7~41 pg/mL)와 72.91 ng/mL (70~250 ng/mL)이었고, 오후 4시에 채혈한 ACTH와 cortisol은 각각 21.46 pg/mL (4.7~41pg/mL)와 67.56 ng/mL (20~90 ng/mL)이었다. E2<8 pg/mL, progesterone 0.230 ng/mL, 17-OH-progesterone 0.130 ng/mL였다.

이 낭성 종양은 췌장 미부와 많은 부분에서 접하고 있고 둔각을 이루고 있어 췌장 미부에서 생긴 낭성 종양으로 생각되었으며, 그 밖에 신장이나 부신에서 생긴 낭성 종양과 감별해야 하나 가능성이 많이 떨어질 것으로 보고 복강경 수술을 시행하였다. 복강경 소견 상 좌부신에서 생긴 낭성 종양이 관찰되어 좌측 부신 절제술을 시행하였다. 수술 후 시행한 조직 병리 검사 상 좌측 부신에 발생한 낭종으로 낭종의 내벽을 자세히 관찰한 결과 모두 혈관 내피 세포와 유사한 납작한 세포로 피복되어 있는 내피성 낭종이었다 (그림 3A, B).

고 찰

부신에 생긴 낭종은 아주 드문 경우로 대개 발생율을 0.06%에서 0.18%로 보고하고 있으며⁷⁾ 국내에서도 강상균 등¹⁾이 1967년 부신피질낭종을 보고한 이래로 현재까지 14예 정도 보고하고 있다 (표 1). 모든 연령에 다 생길 수 있으며 대개 20대에서 40대에서 호발하고 여성 대 남성의 비율은 2:1에서 3:1 정도로 여성에서 많이 생긴다^{7, 13)}. 국내에서 보고된 증례에서도 본 예 포함하여 여성 대 남성이 10:4로 여성에 많았고, 24세부터 63세까지 평균 연령이 45세였다. 대개 일측성으로 오며 좌, 우 발생빈도에는 차이가 없는데 국내에서 보고된 증례들도 일측성으로 좌, 우 발생이 7 : 7로 차이가 없었다 (표 1).

부신 낭종은 보통 조직학적으로 양성이고, 내분비적으로 기능이 없는 경우가 대부분인데 기능이 있는 종양의 경우 수술을 해야 하므로 자세한 병력 청진, 신체 검진, 생화학적인 검사가 필요하다. 본 증례에서도 코티솔치(cortisol level)가 정상으로 기능이 없는 낭종이었다. 크기는 보통 평균 9.6 cm이며, Esquivel와 Grabstald 등¹³⁾이 50 cm 크기의 가장 큰 낭종을 보고한 적이 있다. 본 증례의 경우 크기는 12×11 cm이었다. 가장 흔한 증상으로 복통이 가장 많았으며 (19%) 그 외 복부 팽만감이

Table 1. Summary of adrenal cysts published in Korean literature

Case No.	Author	Published year	Sex/Age	Side	Pathology	Treatment
1	Kang ¹⁾	1967			Cortical cyst	
2	Kim et al	1967	F/38	Left	Hemorrhagic pseudocyst	Excision
3	Lee & Chi	1968	F/51	Left	Lymphangio-matous cyst	Excision
4	Lee et al	1971	F/24	Right	Pseudocyst	Excision
5	Kim et al ²⁾	1981	M/60	Right	Endothelial cyst	Excision
6	Kang et al ³⁾	1982	M/63	Right	Epithelial retention cyst	Excision
7	Kim et al ⁴⁾	1986	M/61	Left	Pseudocyst	Excision
8	Son et al	1986	F/30	Left	Pseudocyst	Excision
9	Choi et al	1986	F/54	Right	Pseudocyst	Excision
10	Moon & Choi	1988	F/28	Right	Hemorrhagic pseudocyst	Excision
11	Chung et al ⁵⁾	1990	F/40	Right	Pseudocyst	Excision
12	Chung et al ⁵⁾	1990	F/26	Left	Pseudocyst	Excision
13	Lim et al ⁶⁾	1996	M/44	Left	Endothelial cyst	Excision
14	Moon et al ⁷⁾	1996	F/57	Right	Pseudocyst	Adrenalectomy
15	Jeon et al	2001	F/63	Left	Endothelial cyst	Adrenalectomy
	-present case					

나 종괴 (10%), 고혈압 (9%), 측복부통증 (6%), 요통 (5%) 등을 보일 수 있다⁹⁾. 부신에 발생하는 양성 병변은 부신내에 생긴 양성 및 악성 종양이 양성 변화를 보이는 경우와 감별이 요구되고, 간장, 비장, 신장 및 췌장에 생기는 양성 병변과 감별이 필요하다. 드물게는 대동맥, 장골동맥, 비장동맥의 동맥류, 비정상적인 임파절, 수신증, 간비장비대 등과 감별이 필요하다. 본 증례에 있어서도 초음파 검사상 췌장 후부에 생긴 양성 병변으로 처음에는 췌장 낭종으로 오인하였다가 수술 중에 부신 낭종으로 판명된 경우이다.

방사선 검사상 병변이 석회화를 보일 수 있으며, 이 석회화는 양성 (45%)이나 악성 (42%) 병변 모두에서 볼 수 있으므로 양성이나 악성을 감별하는데 도움이 되지는 않는다^{8,9)}. 진단의 경우 복부 전산화 단층 촬영이나 복부 초음파가 비교적 유용한 검사이며, 보통 전산화 단층 촬영의 경우 지름 1 cm 병변을 찾아내는데 85%에서 95%의 정확도를 보인다. 초음파는 병변의 테두리에 지방이 적은 경우 도움이 된다. 자기 공명 영상의 경우 선종이 기능이 있는지 없는지 감별하는데 유용하며, 전이나 갈색 세포종, 부신내 출혈을 진단하기에 좋다. 혈관 조영술의 경우 부신 낭종을 진단하는데 있어서 특이하지는 않으며, 부신 악성종양일 경우 시행하는 것이 도움이 되나 침습적인 방법이라는 점이 단점이다. Iodine 131 MIBG (metiodobenzylguanadine)의 경우 임상적으로나 생화학적으로 갈색 세포종이 의심이 되나 복부 전산화 단층 촬영에서 나타나지 않는 경우에 도움이 된다. Iodine 131 MIBG와 전산화 단층 촬영을 같이 시행하면 서로 상호 보완적으로 도움을 줄 수 있다.

Abeshouse 등¹⁰⁾은 1959년 부신 낭종을 네 아형으로 나누었고, 이는 내피성, 상피성, 기생충성 및 가성 낭종이다. 이어 Foster 등¹¹⁾이 1966년 부신 낭종 220예를 분석하여 각각의 빈도를 발표하였는데, 내피성 낭종이 전체의 45%로 가장 많았고, 가성 낭종이 39%, 상피성 낭종 9%, 기생충성 낭종 7%로 보고하였다. 내피성 낭종은 다시 두 가지 아형으로 나누어 림프관종성은 42%, 혈관종성이 3%를 차지한다고 보고하였다. 최근 1999년 Neri와 Nance⁹⁾가 515예를 분석한 결과 가성 낭종 56%, 내피성 24%, 상피성 6%, 기생충성 2%, 원인 불명 12%였고, 내피성 낭종 중 림프관종성은 16%, 혈관종성은 3%였다. 국내에서도 1967년 첫 보고가 있는 후로 본 예 포함하여 전체 15예 중에 가성 낭종 9예 (60%), 내피성 낭종 4예

(27%), 상피성 낭종 1예 (7%) 정도가 보고되고 있으며 (표 1), 이는 부검예를 포함하지 않고 임상적으로 흔히 발견되는 낭종이 가성 낭종이기 때문이라 생각된다. 본 증례의 경우는 낭종의 내벽이 변연이 매끄럽고 납작한 내피 세포로 피복되어 있는 내피성 낭종으로 보통 림프관종성의 경우 부신 내의 림프관의 확장증이나 발생과정 중 결함 때문에 생기는 것으로 보고되고, 혈관종성의 경우 혈관의 확장증으로 생기는 것으로 보고 있다. 가성 낭종은 두번째로 많이 생기는 아형으로 보통 크기가 크고 하나 생기는 것이 특징이다. 가성 낭종의 벽은 진한 섬유성 결체 조직으로 이루어져 있으며 이러한 벽들 사이사이로 부신피질이 결합되어 있으며, 벽의 두께는 1에서 5 mm 정도이다. 가성 낭종은 정상 부신이나 종양 내의 혈관 외 출혈에 의해 생길 수 있으며, 일차 종양이나 혈관 종양의 양성 퇴화에 의해서도 생길 수 있다. 이런 병변은 양성 혹은 악성 종양, 압력 손상, 감염 등에서 볼 수 있다. 몇몇 연구자들은 가성 낭종의 기원이 혈관이라고 주장하는데 이들은 혈관 내피 세포로 덮인 낭종이 출혈이나 손상을 입으면 반흔이 혈관 내피 세포들을 대체하여 가성 낭종이 생긴다는 견해이다^{15,18)}. 이에 대한 근거는 면역조직화학적 방법으로 기저막에 대한 항체 (laminin, type IV collagen)를 이용하여 증명해 볼 수 있다²⁰⁾.

상피성 낭종의 경우는 아주 드물며 몇몇 작가들은 이 낭종의 존재 여부를 의문시 하기도 한다. 비록 드물지만 이러한 상피성 낭종을 그 병인에 따라 배아성 낭종 (embryonal cyst), 부신 선종에서 생긴 낭종 (cyst forming in adrenal adenoma), 선정체 낭종 (glandular retention cyst)로 나눌 수 있다. 기생충성 낭종의 경우 대부분 포충낭 (echinococcus)이 그 원인이며, 두꺼운 벽을 갖는다. casoni skin test에 양성이며 포충낭을 가진 환자의 0.5% 미만에서 부신 침범이 있다.

흡인의 경우 부신 내 종양의 감별 진단에 도움이 될 수 있다. 투명액의 경우 대개 양성이며, 혈성의 경우에는 악성이나 양성 모두 존재 하였다¹⁶⁾. 22명의 환자에서 Katz 등¹⁷⁾이 흡인 세침 검사를 시행하여 세포 병리 검사를 한 결과 악성 종양에 대한 민감도 (sensitivity)는 85%, 특이도 (specificity)는 100%로 보고하면서 부신 종양에 대한 흡인 세침 검사가 간단하고 안전하면서 비교적 정확도가 높은 검사라고 주장하였다. Scheible¹⁴⁾과 Tung 등¹⁹⁾은 단순 부신 낭종에 대해 흡인을 하는 것을

추천하였고, 흡인액에 대해 세포병리검사, 도말검사, 배양검사, 부신 스테로이드 호르몬, 콜레스테롤 검사와 낭조영술 (cystogram)을 시행하였다. 혈성 낭액, 세포병리검사상 악성 소견, 낭표면이 낭조영술상 불규칙하면 수술의 적응증이 되었다.

낭종이 악성의 가능성이 있는 경우, 증상을 유발하는 경우, 병변의 크기가 큰 경우, 출혈이 있는 경우는 수술을 시행해야 한다. Rosenblit 등¹²⁾은 모든 비기능성 부신낭종을 세 가지로 나누었는데, 이는 각각 합병되지 않은 낭종 (uncomplicated cysts), 합병된 낭종 (complicated cysts), 중간군 (intermediate group)이다. 합병되지 않은 낭종 (uncomplicated cysts)의 경우는 직경의 크기가 5~6 cm 이하이면서 거의 균일하게 물과 같은 감쇠 (near-water attenuation)를 가지며 벽의 두께가 3 mm 이내이고 보존적 치료를 요한다. 합병된 낭종 (complicated cyst)의 경우는 균일하지 못하고, 고감쇠가 (high attenuation value)를 가지며 점상의 중앙 혹은 두꺼운 변연의 석회화를 동반하며 벽두께가 5 mm 보다 크다는 것 중에 한 가지라도 만족하는 경우에 해당되며 이러한 낭종은 출혈을 일으키기 쉽기 때문에 수술적 치료를 해주어야 한다. 중간 병변 (intermediate lesion)의 경우 크기는 5~6 cm 이고 물보다 약간 높은 감쇠 (attenuation)를 가지며 벽두께가 3~5 mm 인 경우 경우로 경피적인 낭종 흡인과 보존적인 치료가 필요하다. 본 증례의 경우는 크기가 크고 증상을 유발하여 수술적 치료가 필요하였으며, 국내에 보고된 여러 증례에서도 같은 이유로 수술적 치료를 행하였다 (표 1).

요 약

저자는 건강 검진상 복부 초음파 검사에 의해 우연히 발견되어 그 당시 체장의 낭성 종양으로 오인하였던 63세 여자 환자의 부신에 발생한 내피성 낭성 종양 1예를 경험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCE

- 1) 강상균. 부신피질낭종의 1예. 대한병리학회지 1:69, 1967
- 2) 김자치, 장석균, 주상용. 부신낭종: 1예 보고. 대한외과학회지 23:82-87, 1981
- 3) 강창석, 김병기, 심상인, 김전무. 부신에 발생한 상피성 낭종. 대한병리학회지 16(4):827-831, 1982
- 4) 이만호, 이상중, 홍기영, 오동주, 김영희, 배원길, 김명숙. 부신 가성낭종의 1예. 대한내분비학회지 1:63-67, 1986
- 5) 정제빈, 배희열, 김병천, 정경석, 석 홍. 부신 낭종: 2예 보고. 대한외과학회지 39(6):823-831, 1990
- 6) 임성철, 이미숙, 김윤신, 기근홍, 정유경, 이미자, 정순봉. 부신에 발생한 내피성 낭종. 대한병리학회지 30: 740-745, 1996
- 7) Tagge DU, Baron PL. Giant adrenal cyst: management and review of the literature. Am Surg 63:744-746, 1997
- 8) Hirota S, Fukuda T, Matsumoto S, Yoshikawa T, Ichikawa S, Hanioka K. Adrenal endothelial cyst with massive central calcification. Abdom Imaging 24:511-513, 1999
- 9) Neri LM, Nance FC. Management of adrenal cysts. Am Surg 65:151-163, 1999
- 10) Abeshouse GA, Goldstein RB, Abeshouse BS. Adrenal cyst: review of the literature and report of the three cases. J Urol 81:711-719, 1959
- 11) Foster D. Adrenal cyst: review of the literature and report of cases. Arch Surg 92:131-143, 1966
- 12) Rosenblit A, Morehouse HT, Amis ES Jr. Cystic adrenal lesions: CT features. Radiology 201:541-548, 1996
- 13) Esquivel E Jr, Grabstald H. Giant adrenal cyst. J Urol 94:635-638, 1965
- 14) Scheible W, Coel M, Siemers PT, Siegel H. Percutaneous aspiration of adrenal cysts. Am J Roentgenol 128:1013-1016, 1977
- 15) Incze JS, Lui PS, Merriam JC, Austen G, Widrich WC, Gerzof SG. Morphology and pathogenesis of adrenal cysts. Am J Pathol 95:423-432, 1979
- 16) Copeland PM. The incidentally discovered adrenal mass. Ann Intern Med 98:940-945, 1983
- 17) Katz RL, Patel S, Mackay B, Zornoza J. Fine aspiration cytology of the adrenal gland. Acta Cytol 28:269-282, 1984
- 18) Groben PA, Roberson JB Jr, Anger SR, Askin FB, Price WG, Siegal GP. Immunohistochemical evidence for vascular origin of primary adrenal pseudocysts. Arch Pathol Lab Med 110:121-123, 1986
- 19) Tung GA, Pfister RC, Papanicolaou N, Yoder IC. Adrenal cyst: imaging and percutaneous aspiration. Radiology 173:107-110, 1989
- 20) Gaffey MJ, Mills SE, Fechner RE, Bertholf MF, Allen MS Jr. Vascular adrenal cysts: a clinicopathologic and immunohistochemical study of endothelial and hemorrhagic (pseudocystic) variants. Am J Surg Pathol 13:740-747, 1989